

Traduction française de l'échelle Charcot- Marie-Tooth Disease Pediatric Scale

Cynthia Gagnon, Rami Massie, Marjolaine Tremblay, Sylvie Darcy, Mélissa Martel, Joshua Burns

Université de Sherbrooke - Faculté de médecine et des sciences de la santé, Jonquière, Québec, Canada (CG); Université McGill - Département de Neurologie et Neurochirurgie, Montréal, Québec, Canada (RM); Centre intégré universitaire de santé et de services sociaux du Saguenay-Lac-Saint-Jean - Groupe de recherche interdisciplinaire sur les maladies neuromusculaires, Jonquière, Québec, Canada (MT); Centre hospitalier universitaire Sainte-Justine - Centre de réadaptation Marie-Enfant, Montréal, Québec, Canada (SD, MM); University of Sydney - Faculty of Health Sciences, Sydney, New South Wales, Australia (JB)

Correspondance: Cynthia Gagnon, Faculté de médecine et des sciences de la santé, Université de Sherbrooke, Centre de santé et de services

RÉSUMÉ: Cet article présente le processus de traduction en français du Charcot-Marie-Tooth Disease Pediatric Scale (CMTPedS), le seul outil de mesure validé évaluant la sévérité de la maladie chez les enfants atteints de CMT. Le processus de traduction utilisé s'inspire des lignes directrices de la Food and Drug Administration (FDA). La version préliminaire francophone du CMTPedS a été testée auprès de 14 enfants atteints. Les résultats de l'application démontrent que la passation a été bien tolérée par les enfants et s'est avérée conviviale pour les cliniciens. La disponibilité de cet outil en français semble prometteuse pour le suivi des enfants atteints et la réalisation d'essais clinique.

ABSTRACT: French Translation of the Charcot-Marie-Tooth Disease Pediatric Scale. We describe the translation process we used to translate into French the Charcot-Marie-Tooth Disease Pediatric Scale (CMTPedS), the only validated measuring tool evaluating the severity of the disease in children with CMT. The translation process is based on the Food and Drug Administration Guidelines. The French preliminary version of the CMTPedS was tested on 14 children with CMT. It was well tolerated by the children and deemed to be user- friendly by the physicians. The availability of this French tool seems promising for the clinical follow-up of children with CMT and for those enrolled in clinical trials.

Mots clés: Charcot Marie Tooth Disease, Neuropathology - Pediatric, Neuropathy, Translation

Les maladies de Charcot-Marie-Tooth (CMT) sont des neuropathies héréditaires sensitivo-motrices touchant les enfants et les adultes avec une prévalence d'une personne sur 2 500 dans le monde¹. Elles sont caractérisées principalement par la présence d'une faiblesse musculaire avec une progression distale à proximale, une déformation des pieds et des mains, une hypo/aréflexie, et une altération de la sensibilité et des difficultés proprioceptives². De plus, on observe la présence de fatigue et une réduction de l'endurance. Les limitations mènent souvent à des incapacités dès l'enfance et ont un impact sur la participation aux activités quotidiennes et aux rôles sociaux³. L'âge d'apparition de la maladie est difficile à établir du fait de la lente évolution; mais la plupart des formes de CMT affectent les enfants et les symptômes se développent dans les deux premières décennies de la vie³.

Les études sur l'histoire naturelle des maladies de CMT sont rares, particulièrement chez les

enfants, de même que les instruments de mesure validés pour en évaluer la gravité⁴. Pourtant, une meilleure évaluation des enfants atteints à l'aide d'un outil de mesure validé permettrait une amélioration de la compréhension de la progression de la maladie, l'évaluation des réponses aux traitements et, ultimement, l'optimisation de la qualité des services. Pour les populations adultes atteintes de CMT, le *Charcot-Marie-Tooth Neuropathy Score* (CMTNS) est déjà utilisé dans les milieux de pratique, mais cette échelle démontre une sensibilité aux changements limitée chez les enfants (seulement 4 items sur 9)⁵. Une revue des outils de mesure implantés et validés qui évaluent la sévérité de la maladie chez les enfants atteints de CMT démontre l'existence d'un seul outil; le *Charcot-Marie-Tooth Disease Pediatric Scale* (CMTPedS)⁶. Cet outil a été développé afin de mesurer la fonction et la structure du corps des enfants atteints, conformément à la Classification Internationale du Fonctionnement (CIF)⁶.

Le CMTPedS est une échelle utilisée dans plus de 140 universités et hôpitaux, ainsi que dans le cadre d'essais cliniques⁷. Elle a été développée par l'*Inherited Neuropathies Consortium* dans un processus en quatre étapes. Une première revue de littérature a permis d'identifier le besoin de développer une échelle de mesure à plusieurs items, centrée sur le patient, pour évaluer tous les aspects de la maladie chez les enfants de trois ans et plus. Suite à une seconde revue de littérature et à la consultation d'experts, une version préliminaire de 37 items a été développée et évaluée lors d'une étude pilote. Une version de travail de 28 items a ensuite été testée auprès de 172 enfants atteints de CMT. Suivant la validation, la version finale de l'outil est une échelle multidimensionnelle comprenant 11 items qui évaluent la force musculaire, la dextérité, la sensibilité, la marche, l'équilibre et les fonctions motrices. Son administration prend environ 25 minutes et elle doit être complétée par un professionnel de la santé (physiothérapeute, ergothérapeute, neurologue) ayant reçu la formation nécessaire. L'outil a été démontré valide, fidèle (cohérence interne, inter-juge) et sensible aux changements et peut être utilisé de façon fiable chez les enfants et les adolescents de 3 à 21 ans pour évaluer la gravité de la maladie de CMT⁶. De plus, un outil de calcul des scores est disponible en ligne; on y retrouve aussi des capsules vidéo (en anglais) faisant la démonstration de la passation de chaque item (<https://www.cmtpeds.org/>).

L'objectif de cet article est d'exposer le processus de traduction française du CMTPedS afin de pouvoir l'utiliser chez les populations francophones.

Pour réaliser la version française du CMTPedS, une méthode de traduction renversée parallèle s'inspirant des lignes directrices de la Food and Drug Administration (FDA) a été utilisée⁸. Il est à noter que ces lignes directrices ont été élaborées pour les instruments de mesure de type PRO (*patient-reported outcomes*). Le contenu du CMTPedS diffère de ce type d'outil puisqu'il renferme des instructions pour les cliniciens plutôt que des questions pour les personnes atteintes. Ainsi, les lignes directrices de la FDA ont été adaptées afin de réaliser un processus de traduction dans une perspective de compréhension des instructions par les cliniciens qui auront à administrer l'outil. Le processus de traduction du CMTPedS a été effectué par une équipe réunissant plusieurs experts (auteur de l'outil, neurologue, physiothérapeute, ergothérapeute, travailleuse sociale). Les étapes de la traduction ont été suivies afin d'assurer la meilleure concordance possible entre la version originale et la version française tout en étant adapté au vocabulaire utilisé en pratique clinique. Ce processus comprend plusieurs étapes décrites brièvement, avec les dispositions prises pour la traduction du CMTPedS.

La préparation inclut les dispositions à prendre avant de commencer la traduction de l'instrument. Il s'agit d'obtenir, dans un premier temps, la permission de l'auteur principal pour traduire l'outil et de maintenir un contact avec celui-ci à des fins de clarification de concepts. Les personnes impliquées dans la traduction sont alors recrutées, dont au moins une clinicienne qui utilisera l'outil auprès

d'enfants atteints de CMT et une traductrice médicale agréée. Pour la traduction du CTMPedS, l'équipe de recherche a d'abord contacté l'auteur principal de l'instrument de mesure (Dr. Joshua Burns) et a obtenu la permission d'effectuer la traduction. L'auteur a aussi été invité à s'impliquer dans le processus de traduction afin de clarifier certains concepts. De plus, un partenariat avec une clinique neuromusculaire francophone (Centre de réadaptation Marie-Enfant de l'hôpital Sainte-Justine, Québec, Canada) utilisant l'outil a été formé dans le but d'obtenir une vision clinique de l'application des items.

La traduction initiale vise à élaborer une première version de l'outil en français. Une professionnelle de recherche francophone ayant une bonne maîtrise de l'anglais a effectué la traduction initiale. Cette version a été révisée par la chercheuse principale, la coordonnatrice clinique et une physiothérapeute du centre de réadaptation afin d'avoir une traduction la plus fidèle possible aux réalités de la pratique.

Lors de la traduction renversée, la traduction française fait l'objet d'une nouvelle traduction en anglais. Par la suite, une révision de la traduction renversée est effectuée. Il s'agit de comparer la version retraduite en anglais avec la version originale de l'outil de mesure afin de s'assurer de l'équivalence des concepts. Les deux versions sont révisées pour identifier toutes les divergences. Les items problématiques sont revus et la version française est améliorée en conséquence. La traduction de la version française à l'anglais a été effectuée à l'aveugle par une firme spécialisée en traduction incluant une traductrice certifiée et un linguiste. La révision de la traduction renversée a été réalisée par une professionnelle de recherche et la chercheuse principale qui ont comparé les deux versions anglaises de l'outil de mesure. Les disparités entre les versions ont été soulignées.

À l'étape d'harmonisation, une rencontre entre les différentes personnes impliquées dans la traduction est réalisée afin d'examiner les items et concepts divergents et d'assurer une validité intertraduction. À cette étape, l'auteur de l'outil est consulté pour résoudre certaines difficultés liées à des concepts nécessitant un éclaircissement. Une version préliminaire de l'outil en français est produite. L'étape d'harmonisation a été effectuée lors d'une rencontre en personne avec la chercheuse principale, une physiothérapeute en centre de réadaptation, un neurologue travaillant auprès de la clientèle et l'auteur principal de la version originale du CMTPedS. Lors de cette rencontre, les participants ont pris des décisions concernant les concepts identifiés comme potentiellement problématiques ou pouvant causer une confusion au niveau du sens et de la compréhension des instructions. Lorsque nécessaire, l'auteur de l'outil a apporté des précisions quant à la signification des concepts afin que la version française soit le plus fidèle possible à l'originale. Les décisions prises par les participants à la rencontre ont été notées et une version préliminaire de l'outil a été développée.

L'application de l'outil dans sa version préliminaire auprès d'enfants francophones atteints de CMT est ensuite réalisée. Cette étape vise à appliquer le nouvel outil à des situations réelles afin de vérifier la compréhension des items et des instructions par les cliniciens. Suite à la disponibilité de la version préliminaire, les cliniciens sont appelés à utiliser le CMTPedS auprès des enfants atteints de CMT nécessitant une évaluation clinique. La version préliminaire française du CMTPedS a été utilisée afin d'évaluer 14 enfants atteints de CMT au Centre de réadaptation Marie-Enfant de l'Hôpital Sainte-Justine (Québec, Canada) de octobre 2014 à mai 2016. Les enfants ont été recrutés dans le cadre de leur visite clinique. Le Tableau 1 résume les caractéristiques des enfants évalués et les résultats au CMTPedS. La moyenne d'âge des enfants est de 12 ans et le résultat total moyen au CMTPedS est de 21 sur 44 avec une étendue de 8 à 32. Le temps de passation de l'outil de mesure est d'environ 45 minutes. Trois ergothérapeutes et deux physiothérapeutes ont participé à l'application de la version française; les ergothérapeutes

ont fait l'introduction et les items sur la dextérité manuelle et la préhension, tandis que les physiothérapeutes ont complété les autres items de l'outil.

L'étape de révision des résultats de l'application et de la finalisation permet de faire les dernières modifications nécessaires dans l'outil préliminaire. Cette étape a permis de constater que selon les cliniciens du Centre de réadaptation Marie-Enfant, l'utilisation du CMTPedS ne cause pas de difficultés particulières. Les instructions des différents items sont bien comprises par les cliniciens et son administration se fait aisément; peu de reformulations sont nécessaires (surtout dans le cas de jeunes ayant des problèmes d'attention). Les cliniciens ayant administré l'outil remarquent une bonne participation des jeunes et un temps de passation réaliste dans le cadre de la pratique clinique. Le tableau 1 présente les résultats pour chacun des items qui démontrent que la majorité des cotations ont été attribuées. On peut constater que 14 cotations réparties à travers huit items n'ont pas été utilisées (32%) par les cliniciens lors de la passation, sur une possibilité de 44 cotations en 11 items.

La correction de la version préliminaire permet de réviser les erreurs possibles et de produire la version finale de l'outil. Suite à cette étape, aucune modification ne fut requise à la lumière des avis des cliniciens. La version préliminaire fut l'objet d'une révision linguistique et la version finale de la traduction française du CMTPedS a été complétée.

La dernière étape consiste à écrire le rapport final sous forme d'article incluant une description de la méthodologie utilisée et une représentation item par item des décisions prises pendant le processus de traduction. Le présent article permet de décrire les étapes de la méthodologie et les décisions prises tout au long du processus et fait état de rapport final pour le projet.

Le CMTPedS est un instrument de mesure prometteur pour l'évaluation des enfants atteints de CMT. Avec la traduction française, celui-ci pourra être potentiellement administré à l'ensemble des enfants atteints de CMT dans les populations francophones. Les résultats pourront ensuite être comparés entre eux et avec les résultats obtenus lors d'essais cliniques réalisés dans d'autres pays. Il sera ainsi possible de documenter l'évolution et l'histoire naturelle de la maladie, d'appliquer une approche pronostique et d'améliorer le suivi des enfants atteints. Dans le futur, la version française de l'outil pourra être validée et sa fidélité documentée auprès d'une cohorte d'enfants atteints de CMT. La disponibilité d'une échelle validée facilitera également la tenue d'essais cliniques de thérapies prometteuses en CMT1A⁹. Une traduction du site Internet dédié à l'instrument a aussi été réalisée et sera mise en ligne. Il est aussi prévu d'effectuer une traduction de l'outil de calcul des résultats afin d'y avoir accès en français.

Les versions originale et française du CMTPedS sont disponibles en fichier supplémentaire.

Tableau 1: Caractéristiques des jeunes évalués et résultats au CMTPedS (N = 14)

Caractéristiques des jeunes					Résultats CMTPedS												Déformation pieds 12 ¹ à -12	
Date de passation	Diagnostic	Sexe	Âge	de technique/ orthèse	m 1	m 2	m 3	m 4	m 5	m 6	m 7	m 8	m 9	m 10	m 11	Score total /44	Gauche	Droit
2014-10-10	europathie indéterminée	M	14 ans	OP ²	4	3	0	0	0	0	0	1	0	0	0	8	-4	-5
2015-03-23	CMT 2	M	12 ans	OP, chevillères	4	3	0	2	2	2	0	4	2	2	3	24	9	12
2015-04-13	CMT 1A	F	9 ans	OP	4	4	0	0	3	0	0	0	0	0	1	12	7	3
2015-04-13	CMT 1A	F	4 ans	Aucune	3	2	0	1	0	1	0	0	1	1	0	9	3	5
2015-05-26	CMT 1A	F	8 ans	OP, chevillères	0	4	0	1	4	0	0	4	2	2	2	19	6	-3
2015-06-04	CMT 1	M	16 ans	Aucune	4	4	0	2	4	0	0	0	2	4	4	24	-9	-5
2015-06-07	CMT 1	M	14 ans	Aucune	4	1	0	2	4	1	0	0	2	3	3	20	-3	-8
2015-07-27	CMT 1A	M	6 ans	Aucune	3	1	0	1	4	1	1	4	2	3	3	23	5	8
2015-08-03	CMT 1	F	14 ans	Aucune	4	4	0	2	4	0	1	4	2	4	4	29	-6	-10
2015-08-10	CMT 1A	M	15 ans	thèses supramalléolaires	4	4	0	1	3	1	3	4	2	4	4	30	-12	-12
2015-08-25	CMT 2	F	17 ans	Aucune	4	4	0	2	4	0	3	4	3	4	4	32	-2	-4
2015-10-27	CMT 1A	F	11 ans	Aucune	4	4	0	1	4	1	1	1	2	2	1	21	1	0
2016-01-06	CMT 1	M	13 ans	Aucune	4	2	0	2	3	0	2	1	2	1	3	20	-12	-7
2016-03-15	CMT 1A	F	16 ans	OP, canne quadripode	2	0	0	2	4	1	0	4	2	4	4	23	-5	-4
Moyenne					3,43	2,86	0	1,36	3,07	0,57	0,79	2,21	1,71	2,43	2,57	21		

¹Négatif : varus, Positif : valgus²Orthèse Plantaire

Remerciements

Ce projet a été réalisé grâce à la participation financière de la *Rare Disease Foundation* et de la *BC Children's Hospital Foundation* ainsi que du Fonds de dotation Santé Jonquière inc. Les auteurs remercient Isabelle Côté du Groupe de recherche interdisciplinaire sur les maladies neuromusculaires et Barbara Pattison de Traduction Tandem pour leur collaboration lors du processus de traduction, ainsi que les membres du personnel du Centre de réadaptation Marie-Enfant de l'Hôpital Sainte-Justine ayant participé au projet.

Conflits d'intérêt

CG déclare : Biogen, consultant / conseiller et frais de conférencier. RM déclare : Genzyme, frais de présentateur et de conférencier. MT, DS MM et JB n'ont pas de conflit d'intérêt à déclarer.

Références

1. Skre, H., *Genetic and clinical aspects of Charcot-Marie-Tooth's disease*. Clin Genet, 1974. **6**(2): p. 98-118.
2. Pareyson, D. and C. Marchesi, *Diagnosis, natural history, and management of Charcot-Marie-Tooth disease*. Lancet Neurol, 2009. **8**(7): p. 654-67.
3. Gagnon, C., et al., *Report of the first Outcome Measures in Myotonic Dystrophy type 1 (OMMYD-1) international workshop: Clearwater, Florida, November 30, 2011*. Neuromuscul Disord, 2013. **23**(12): p. 1056-68.
4. Reilly, M., et al., *168th ENMC International Workshop: Outcome measures and clinical trials in Charcot-Marie-Tooth disease (CMT)*. Neuromuscular Disorders, 2010. **20**(12): p. 839-846.
5. Haberlova, J. and P. Seeman, *Utility of Charcot-Marie-Tooth Neuropathy Score in children with type 1A disease*. Pediatr Neurol, 2010. **43**(6): p. 407-10.
6. Burns, J., et al., *Validation of the Charcot-Marie-Tooth disease pediatric scale as an outcome measure of disability*. Ann Neurol, 2012. **71**(5): p. 642-52.
7. Sman, A.D., et al., *Randomised controlled trial protocol of foot and ankle exercise for children with Charcot-Marie-Tooth disease*. J Physiother, 2014. **60**(1): p. 55; discussion 55.
8. Wild, D., et al., *Principles of Good Practice for the Translation and Cultural Adaptation Process for Patient-Reported Outcomes (PRO) Measures: report of the ISPOR Task Force for Translation and Cultural Adaptation*. Value Health, 2005. **8**(2): p. 94-104.
9. Attarian, S., et al., *An exploratory randomised double-blind and placebo-controlled phase 2 study of a combination of baclofen, naltrexone and sorbitol (PXT3003) in patients with Charcot-Marie-Tooth disease type 1A*. Orphanet J Rare Dis, 2014. **9**: p. 199.